

Intussuscepción colónica en el adulto secundaria a tumor miofibroblástico: Reporte de caso

Colonic instussusception in adults caused by a myofibroblastic tumor: A case report

Roberto Ángel Núñez-González  ^{1*}, Mateo Ponciano-Guerrero¹, José Antonio Ortega-Jiménez¹, José Galaor Gutiérrez-Durante¹, Andrea Paniagua-Quiroga², Mirza Palacios-Rojo³, José Eduardo Zúñiga-Vázquez¹, Paulette Alejandra Montaño-Hernández⁴.

RESUMEN

La intussuscepción intestinal es la principal causa de obstrucción intestinal en los niños sin embargo es inusual en los adultos, siendo responsable de solo el 5% de todas las oclusiones intestinales. La principal causa tiene un mecanismo estructural, a nivel de colon predominan las neoplasias en el 66%. La resección quirúrgica con bordes negativos es el tratamiento definitivo y de elección, siendo baja la recidiva con este tratamiento.

Presentamos el caso de un paciente con intussuscepción colónica causando datos de oclusión intestinal, que fue intervenido de manera urgente de hemicolectomía derecha con ileotransverso anastomosis, evolucionó satisfactoriamente egresando sin complicaciones. En análisis histopatológico de la pieza quirúrgica se reportó un tumor miofibroblástico.

Los tumores miofibroblásticos son una causa inusual de intussuscepción intestinal en el adulto que condiciona una presentación clínica atípica, representando todo un reto diagnóstico. El tratamiento de elección es quirúrgico, actualmente existen muy pocos casos reportados en la literatura por lo que resulta de gran interés el conocimiento de su patogénesis y manejo.

Palabras Clave: Intussuscepción; tumor miofibroblástico; obstrucción intestinal; resección quirúrgica; adultos.

ABSTRACT

Intestinal intussusception is the main cause of intestinal obstruction in children, however in adults it is unusual, being responsible for only 5% of all intestinal occlusions. The main cause has a structural mechanism, in the colon predominate neoplasms in 66%. Surgical resection with negative borders is the choice and definitive treatment, the recurrence is rare.

We present the case of a patient with colonic intussusception causing signs of intestinal occlusion, who was intervened of emergency surgical a right hemicolectomy with anastomosis ileotransverse, with satisfactory evolution and then patient was discharged without complications. Histopathological analysis of the surgical specimen was reported as a myofibroblastic tumor.

Myofibroblastic tumors are a rare cause of intestinal intussusception in adults that conditions and atypical clinical presentation, represent a diagnostic challenge. The treatment of choice is surgical, there are currently very few cases reported in the literature, so the knowledge of its pathogenesis and management is of great interest.

Keywords: Intussusception; myofibroblastic tumour; Intestinal obstruction; surgical resection; adults.

© Núñez-González RA, Ponciano-Guerrero M, Ortega-Jiménez JA, Gutiérrez-Durante JG, Paniagua-Quiroga A, Palacios-Rojo M, et al. Intussuscepción colónica en el adulto secundaria a tumor miofibroblástico: Reporte de caso. *Rev Cadena Cereb.* 2022; 6(1): 50-54.

DOI: 10.5281/zenodo.5721681

Este artículo se distribuye bajo una licencia *Creative Commons BY-NC 4.0 Internacional*

1. Servicio de Cirugía General y Digestiva, Hospital de Especialidades Puebla, Centro Médico Nacional "Gral. De Div. Manuel Ávila Camacho", Instituto Mexicano del Seguro Social. Puebla, México.
2. Servicio de Anestesiología, Hospital Regional de Poza Rica, Instituto de Seguridad y Servicios Sociales de los Trabajadores del Estado. Veracruz, México.
3. Servicio de Medicina Interna, Hospital Regional de Rio Blanco, Servicios de Salud de Veracruz. Veracruz, México.
4. Servicio de Anatomía Patológica, Hospital de Especialidades Puebla, Centro Médico Nacional "Gral. De Div. Manuel Ávila Camacho", Instituto Mexicano del Seguro Social. Puebla, México.

* Autor de Correspondencia: robertoangelnunez@gmail.com

INTRODUCCIÓN

La intususcepción intestinal en el adulto fue reportada por primera vez por Barbette en 1674 en Amsterdam; posteriormente, en 1789 Hunter presentó un informe detallado como "intususcepción". En el adulto representa una forma rara de obstrucción intestinal¹; se define como la invaginación de un segmento proximal del tracto gastrointestinal y su mesenterio dentro de la luz del segmento distal adyacente. El intestino invaginado se desliza dentro del intestino adyacente, propulsado por el peristaltismo, con una consecuente obstrucción intestinal e isquemia².

La intususcepción intestinal es la principal causa de obstrucción intestinal en los niños, pero en los adultos solo conforma el 5% de todas las causas de obstrucciones intestinales y el 0.003%-0.02% de todos los ingresos hospitalarios para adultos³. En adultos suele ser secundaria a una neoplasia maligna. En los adultos la intususcepción intestinal de colon se asocia con carcinoma primario en 65 a 70% de los casos, mientras que en intestino delgado son secundarias a una neoplasia maligna solo en 30 a 35% de los casos⁴. Según la ubicación las intususcepciones se pueden clasificar en tres tipos: enterointérico, cuando se limita al intestino delgado; colocolónico, cuando afecta el intestino grueso; enterocolónico, que puede ser ileocecal o ileoceccolónico. Respecto a la literatura, las intususcepciones ileocecales son las más comunes del tracto gastrointestinal, seguidas de las entero-entéricas las cuales pueden alcanzar hasta arriba del 40% de casos. Respecto a las intususcepciones colónicas podemos decir que es el tipo menos común⁵.

Los tumores miofibroblásticos han sido comúnmente descritos en pulmón; sin embargo, la localización extrapulmonar ocurre comúnmente en mesenterio y omento⁶. La etiología es poco conocida, mientras que algunos autores sugieren un origen neoplásico, otros creen que se trata de una respuesta inmunológica a un proceso infeccioso o inflamatorio, aunque no es una regla los tumores miofibroblásticos inflamatorios suelen encontrarse posterior a cirugía o traumatismo abdominal⁷.

Las manifestaciones clínicas de los tumores miofibroblásticos colónicos depende de la localización anatómica, sin embargo generalmente los tumores miofibroblásticos derivados del tracto gastrointestinal muestran síntomas clínicos inespecíficos como: anemia, obstrucción intestinal, positividad para sangre oculta en heces e intususcepción⁷.

La Tomografía Computarizada (TC) se ha convertido en el estudio de elección para el diagnóstico y la evaluación de la invaginación intestinal en adultos, teniendo una sensibilidad del 58 a 100%. Del 70 al 90% de los casos de intususcepción en adultos requiere tratamiento definitivo, de la cual la resección quirúrgica suele ser el tratamiento de elección¹.

El presente artículo relata un caso clínico de un paciente de 59 años de edad con cuadro atípico de obstrucción intestinal por una

intususcepción intestinal, ocasionada por un tumor miofibroblástico. Este tipo de neoplasia representa todo un reto diagnóstico debido a su baja incidencia y su presentación clínica atípica. Considerada como una patología benigna con posibilidad de progresión maligna, el conocimiento de su tratamiento es imprescindible para otorgar un pronóstico favorable a los pacientes. Se reporta este caso inusual con el objetivo de realizar una revisión de la escasa bibliografía publicada sobre esta enfermedad para conocer y orientar sobre su diagnóstico, el tratamiento y pronóstico.

CASO

Masculino de 59 años de edad con antecedente de hipertensión arterial sistémica en control y sólo antecedente quirúrgico de resección de lipoma de pared abdominal hace 15 años, no refirió otro antecedente quirúrgico o traumático. Inició padecimiento con dolor abdominal generalizado de predominio en marco colónico derecho, tipo cólico con intensidad 7/10 en la escala análoga de dolor, acompañado de distensión abdominal, evacuaciones diarreicas sin sangre ni moco con exacerbación del dolor por lo que se realiza ultrasonido y TC de abdomen simple y contrastada donde por hallazgos se reportó intususcepción colónica en ángulo hepático, (**Figura 1**) Se evidencia signo de Diana típico de la intususcepción intestinal a nivel de un corte axial tomográfico, previamente valorado encontrando abdomen con peristalsis disminuida, distensión abdominal, dolor a la palpación profunda en hemiabdomen derecho, Blumberg negativo, ureterales y apendiculares negativos, timpanismo a la percusión, no presentaba datos de irritación peritoneal, sin embargo sin tolerar la vía oral y con cuadro de obstrucción intestinal, conjuntamente con los hallazgos tomográficos de intususcepción se decidió la intervención quirúrgica para exploración encontrando intususcepción colónica a nivel de colon ascendente llegando hasta ángulo hepático, con tumor de 10cm x 10cm libre que no invade serosa, ganglios palpables centrales sin otro agregado, se decide realizar hemicolectomía derecha e ileotransverso anastomosis termino-terminal (**Figura 2**), con posterior egreso a piso y continuando con evolución de manera favorable se inicia dieta líquida al quinto día, adecuada tolerancia y con progresión de la misma sin complicaciones se decide egreso a los 7 días por mejoría, el paciente acudió a seguimiento por consulta externa un mes después con revisión departamental de reporte histopatológico e inmunohistoquímico compatible con tumor miofibroblástico inflamatorio ulcerado sin evidencia de infiltración a la pared intestinal, bordes quirúrgicos libres de lesión (**Figura 2**), el paciente continua con adecuada evolución, sin requerimiento de tratamiento adyuvante por oncología médica, teniendo como tratamiento definitivo la resección quirúrgica, actualmente sin datos de complicaciones tardías o recurrencia, continua su vigilancia por la consulta externa.

DISCUSIÓN

En la intususcepción o invaginación intestinal a diferencia de los niños en los adultos es una causa infrecuente de obstrucción intes-

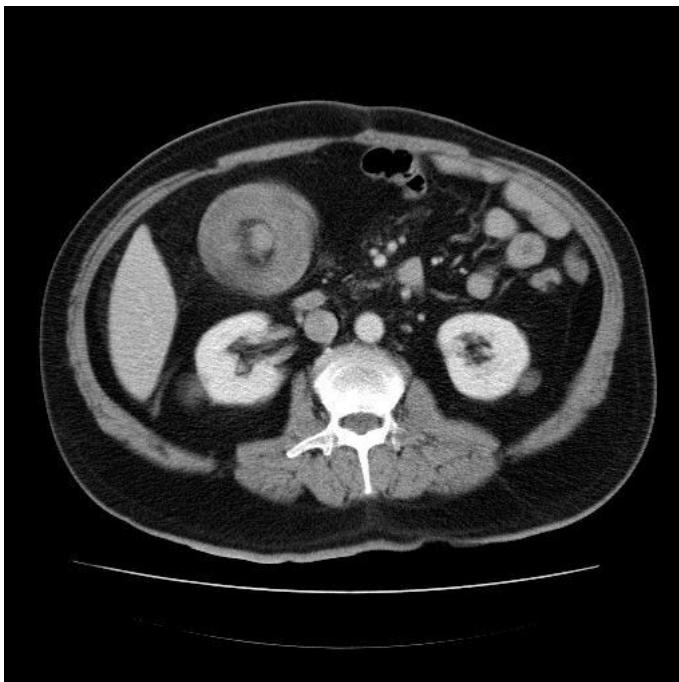


Figura 1. Tomografía axial computarizada abdominal en la que se puede evidenciar edema de pared, con signo típico de Diana a nivel de colon ascendente llegando hasta ángulo hepático (Tomada por: Dr. Roberto Ángel Núñez González).



Figura 2. Producto de hemicolectomía derecha que muestra un tumor intraluminal a nivel de colon ascendente sin invasión de serosa (Tomada por: Dr. Mateo Ponciano Guerrero).

tinal. El incremento de volumen en la luz intestinal produce un efecto de masa que puede actuar como válvula siendo el punto desencadenante para que cause actividad hiperperistáltica ocasionando que un segmento de intestino se proyecte hacia la luz ocasionando una invaginación intestinal. La mayoría de las intususcepciones intestinales en adultos conllevan un proceso patológico, siendo que hasta el 60% se deban a neoplasias⁸. Tal es el caso de nuestro paciente que desarrolló una neoplasia de origen benigno llamado tumor miofibroblástico siendo infrecuente y que ha sido poco reportado en esta ubicación y que tiene un desenlace con pronóstico bueno al tener un tratamiento oportuno.

Los tumores miofibroblásticos tienen un comportamiento benigno, aunque su etiología aún es desconocida se ha encontrado relación con: el virus Epstein-Barr, Citomegalovirus, enfermedades del colágeno y autoinmunes, Herpes virus tipo 8, niveles elevados de interleucinas (interleucina 6) y ciclina D1, infecciones por *Campylobacter jejuni*, entre otras¹.

Las intususcepciones ileocecales son las más frecuentes de todas las intususcepciones gastrointestinales, seguidas de las intususcepciones entero-entéricas, que pueden representar hasta el 40% de los casos. Las intususcepciones colónicas son el tipo menos común⁵ tomando relevancia en este caso clínico que reportamos siendo el tipo menos común y más raro aún por un tumor miofibroblástico inflamatorio.

La intususcepción es de difícil diagnóstico en adultos debido a que los pacientes usualmente presentan síntomas inespecíficos como dolor abdominal, náusea y vómito⁶ siendo demasiado inespecíficos como el cuadro clínico de presentación en este caso requiriendo estudios complementarios para orientar el diagnóstico, decidir el plan de tratamiento y por último el estudio histopatológico e inmunohistoquímico para confirmar el diagnóstico definitivo.

La TC ha sido la técnica de elección en los últimos años para el estudio del dolor abdominal agudo. En la intususcepción intestinal se puede encontrar el signo de diana mediante TC, así como observar una masa que da la apariencia de una "salchicha" que conforman los diferentes datos tomográficos que orientan al diagnóstico de intususcepción, sumando la atenuación de la pared intestinal y la grasa intraluminal, dilatación proximal y descompresión distal, edema de pared y cambios en la densidad compatibles con compromiso vascular⁴. Tal y como se mostró en la **Figura 1** del caso con evidente signo de diana en el corte axial.

La imagen que se obtiene depende de la ubicación, el corte tomográfico, el grosor de la pared intestinal y la permeabilidad de la luz. La imagen en "salchicha" se observa cuando el haz de la TC es paralelo u oblicuo, es decir en un corte coronal o sagital⁵. Los estudios de imagen orientaron sobre el diagnóstico de intususcepción intestinal sin embargo la etiología no podía confirmarse, siendo necesarios los estudios definitivos de patología para el diagnóstico definitivo de este caso.

Los tumores miofibroblásticos han sido estudiados de acuerdo a su composición histopatológica arrojando resultados recientes, sobre sus tres características histológicas principales. Enumerándolas en compuesto por:

- Células inflamatorias y tener un estroma mixoide.
- Proliferación compacta de células fusiformes.
- Contiene abundante colágeno en forma de placa⁹.

Lo anterior, tal y como se muestra en la microfotografía con tinción de hematoxilina y eosina de patología de nuestro paciente (**Figura 3**).

Inmunohistoquímicamente, sus características principales son la reactividad citoplasmática difusa intensa para la vimentina siendo típica para prácticamente todos los tumores miofibroblásticos inflamatorios. En cuanto a la reactividad para la actina del músculo liso y la actina específica de músculo varía de un patrón focal a difuso en el citoplasma de las células fusiformes y en muchos casos se identifica la desmina. La confirmación de la proteína quinasa del linfoma anaplásico (ALK) o reordenamientos del gen ALK tiene utilidad para la distinción y

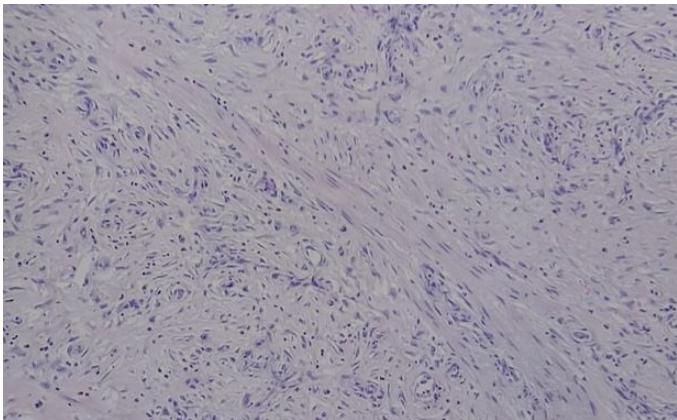


Figura 3. Fotomicrografía con tinción hematoxilina y eosina 10X donde es posible apreciar conformación por células fusiformes, organizadas en fascículos (Tomada por: Dra. Paulette Alejandra Montaño Hernández).

el diagnóstico de los tumores miofibroblásticos de colon y otras células de neoplasias con característica fusiforme (tumor del estroma gastrointestinal, leiomioma, leiomiosarcoma y schwannoma)⁷, concordante con las características histológicas y con los estudios de inmunohistoquímica realizados en nuestro caso, los cuales resultaron actina de músculo liso (AML) positivo, vimentina (VIM) y ALK positivo (**Figura 4**).

Es difícil distinguir las características anatómicas distintivas, debido al compromiso vascular, edema de pared que condicionan hallazgos amorfos por la inflamación. Y siendo imposible determinar si la masa que se observa por TC es benigna o maligna⁵. Incluso es incierta la causa de la intususcepción durante los hallazgos operatorios donde sólo se observa un tumor que condiciona la invaginación de los segmentos intestinales en este caso colónica como lo muestra la imagen de nuestro caso (**Figura 2**).

No podemos descartar por completo la malignidad preoperatoriamente, por lo que es difícil determinar el margen de resección quirúrgica. Tenemos que comprender los tumores miofibroblásticos inflamatorios con precisión y tener cuidado de evitar un diagnóstico erróneo, operaciones excesivas y tratamientos innecesarios⁷. Sin embargo, ante los hallazgos de un tumor que condicionó la oclusión intestinal se decidió realizar hemicolecotomía derecha con ileotransverso anastomosis asegurando márgenes adecuados del caso que es lo óptimo para este tipo de tumores.

Los tumores miofibroblásticos inflamatorios en colon son raros, en PUBMED hasta el 2012 sólo había 6 casos reportados en adultos. Es una entidad de difícil diagnóstico siendo necesario el estudio histopatológico⁷, se presentan de forma atípica y su resolución requiere de cirugía con bordes libres de tumor la cual determina una curación satisfactoria como en el caso presentado.

Los tumores miofibroblásticos inflamatorios que se originan en el colon poseen un comportamiento clínico más agresivo que las lesiones extraabdominales. Es por este motivo que es necesario un seguimiento regular, ya que pueden recurrir local o sistémicamente¹⁰. En tumores con diámetro > 8 cm y que demuestran invasión local tienen mayor riesgo de recurrencia. Se han descrito recidivas antes del primer año de la cirugía¹¹, sin embargo se han encontrado casos de pacientes que tras 9 años después de una resección incompleta presentan recidiva. En estos casos la resección completa de las recurrencias es lo más recomendable, aunque se han reportado regresiones espontáneas⁸. En el caso de nuestro paciente se inicia vigilancia durante 5 años por nuestro servicio, actualmente paciente se encuentra en periodo libre de enfermedad, sin tener que requerir tratamiento adyuvante por otro servicio con vigilancia por la consulta externa.

En conclusión, la intususcepción intestinal es muy rara en adultos, siendo una causa de obstrucción intestinal en este grupo de edad sin embargo se debe de sospechar un origen neoplásico al suscitarse,

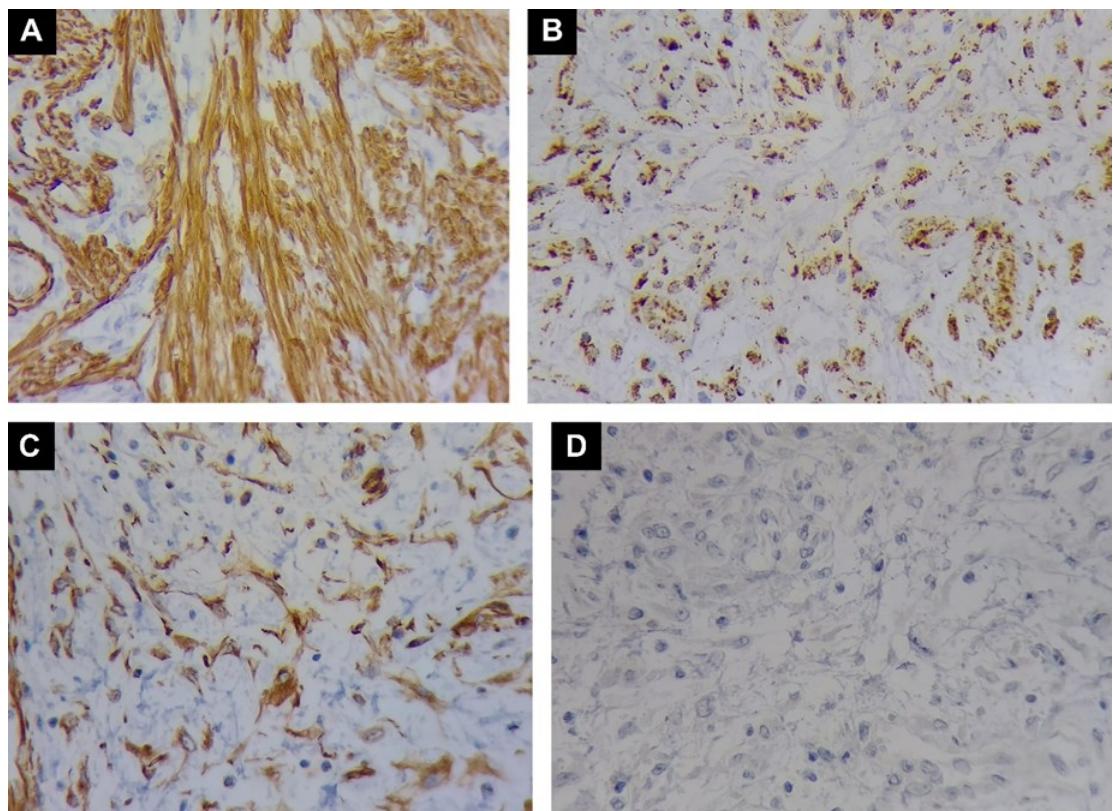


Figura 4. Estudios de inmunohistoquímica: A) AML expresión positiva en 80%; B) CK expresión positiva en 40%; C) VIM expresión positiva en 40% y; D) ALK negativo (Tomadas por: Dra. Paulette Alejandra Montaño Hernández).

el tumor miofibroblástico inflamatorio es una neoplasia inusual que se comporta de forma benigna, se requiere de diagnóstico histopatológico e inmunohistoquímico, su cuadro clínico es atípico y su tratamiento de elección suele ser quirúrgico con resección completa y márgenes quirúrgicos libres a fin de reducir el riesgo de recidiva, debido a que existen reportes de recidivas por lo que es importante su vigilancia estrecha.

REFERENCIAS

1. Marinis A, Yiallourou A, Samanides L, Dafnios N, Anastasopoulos G, Vassiliou I, et al. Intussusception of the bowel in adults: a review. *World J Gastroenterol.* 2009; 15(4): 407-11. DOI: [10.3748/wjg.15.407](https://doi.org/10.3748/wjg.15.407)
2. Gallegos-Sierra C, Belmonte-Chico M, Ramírez-Jaimez J, De la Cruz-Temores S, Leonher-Ruezga KL. Intestinal intussusception secondary to myofibroblastic tumour in an elderly patient. *Case report. Cir Cir.* 2017; 85(5): 444-48. DOI: [10.1016/j.circen.2017.11.015](https://doi.org/10.1016/j.circen.2017.11.015)
3. Yakan S, Caliskan C, Makay O, Denecli AG, Korkut MA. Intussusception in adults: clinical characteristics, diagnosis and operative strategies. *World J Gastroenterol.* 2009; 15(16): 1985-9. DOI: [10.3748/wjg.15.1985](https://doi.org/10.3748/wjg.15.1985)
4. Onkendi EO, Grotz TE, Murray JA, Donohue JH. Adult intussusception in the last 25 years of modern imaging: is surgery still indicated? *J Gastrointest Surg.* 2011; 15(10): 1699-705. DOI: [10.1007/s11605-011-1609-4](https://doi.org/10.1007/s11605-011-1609-4)
5. Valentini V, Buquicchio GL, Galluzzo M, Ianniello S, Di Grezia G, Ambrosio R, et al. Intussusception in Adults: The Role of MDCT in the Identification of the Site and Cause of Obstruction. *Gastroenterol Res Pract.* 2016; 2016: 5623718. DOI: [10.1155/2016/5623718](https://doi.org/10.1155/2016/5623718)
6. Ida S, Matsuzaki H, Kawashima S, Watanabe M, Akiyama Y, Baba H. Adult intestinal intussusception caused by an inflammatory myofibroblastic tumor. *Case Rep Gastroenterol.* 2013; 7: 224-8. DOI: [10.1159/000351825](https://doi.org/10.1159/000351825)
7. Gupta RK, Samalavicius NE, Sapkota S, Sah PL, Kafle SU. Colonic inflammatory myofibroblastic tumours: an institutional review. *Colorectal Dis.* 2013; 15(5): e239-43. DOI: [10.1111/codi.12149](https://doi.org/10.1111/codi.12149)
8. Aguirre F, Silva A, Parra P, Salcedo D, López P, Acevedo Y. Intususcepción como causa de obstrucción intestinal en el adulto: un desafío para los cirujanos. *Rev Colomb Cir.* 2019; 34(1): 79-86. DOI: [10.30944/20117582.102](https://doi.org/10.30944/20117582.102)
9. Koyuncuer A. Inflammatory myofibroblastic tumor of the small-bowel mesentery: A case report of nonspecific clinical presentation and a review of the literature. *Int J Surg Case Rep.* 2014; 5(12): 1214-7. DOI: [10.1016/j.ijscr.2014.11.054](https://doi.org/10.1016/j.ijscr.2014.11.054)
10. Coffin CM, Hornick JL, Fletcher CD. Inflammatory myofibroblastic tumor: comparison of clinicopathologic, histologic, and immunohistochemical features including ALK expression in atypical and aggressive cases. *Am J Surg Pathol.* 2007; 31: 509-20. DOI: [10.1097/01.pas.0000213393.57322.c7](https://doi.org/10.1097/01.pas.0000213393.57322.c7)
11. Ciftci AO, Akçören Z, Tanyel FC, Senocak ME, Çağlar M, Hiçsonmez A. Inflammatory pseudotumor causing intestinal obstruction: diagnostic and therapeutic aspects. *J Pediatr Surg.* 1998; 33(12): 1843-5. DOI: [10.1016/s0022-3468\(98\)90303-7](https://doi.org/10.1016/s0022-3468(98)90303-7)

FINANCIAMIENTO

Los autores declaran que no recibieron apoyo financiero de personas físicas o morales.

CONFLICTOS DE INTERÉS

Los autores declaran que no tienen conflictos de interés.